

DOI: <https://doi.org/10.17816/psaic1501>

Научная статья



Клинический пример успешной лапароскопической резекции редкой фокальной формы врожденного гиперинсулинизма с обзором литературы

А.А. Сухоцкая, И.М. Каганцов, В.Г. Баиров, М.Г. Витовщик, И.Л. Никитина,
Д.В. Рыжкова, Л.Б. Митрофанова, Л.Р. Саракаева

Национальный медицинский исследовательский центр им. В.А. Алмазова, Санкт-Петербург, Россия

Аннотация

Врожденный гиперинсулинизм — тяжелое заболевание, которое вызывает необратимое повреждение коры головного мозга. В статье представлено клиническое наблюдение успешного хирургического лечения ребенка с крайне редкой формой гиперинсулинизма с наличием двух фокусов в противоположных концах поджелудочной железы. С рождения ребенок находился в крайне тяжелом состоянии в связи с рецидивирующими гипогликемиями. В возрасте 2 нед. ребенку был установлен диагноз гиперинсулинизма. Начата специфическая терапия диазоксидом и октреотидом, но она оказалась неэффективной (сохранялась высокая потребность в парентеральном введении глюкозы, октреотид давал лишь частичный результат). В возрасте 1 мес. ребенку была проведена позитронно-эмиссионная томография в сочетании с компьютерной томографией с ¹⁸F-ДОФА, выявлена фокальная гиперфиксация радиофармпрепарата в хвосте и головке поджелудочной железы, что могло свидетельствовать о наличии двух патологических очагов или об очаге в хвосте и физиологическом накоплении радиофармпрепарата в головке. В возрасте 1 мес. 20 дней ребенок взят в операционную: при лапароскопической ревизии поджелудочной железы визуализирован очаг в хвосте, подтвержден данными экспресс-биопсии, произведена резекция хвоста (15 %) с подтверждением «чистых» краев резекции. При дальнейшей ревизии обнаружен очаг в головке, произведена его резекция, с гистологическим подтверждением полноты резекции. На 12-е сутки после операции ребенок был выписан без терапии с клиническим выздоровлением. В настоящее время продолжается наблюдение (более 6 мес.), ребенок растет и развивается по возрасту. Проводилась проба с голоданием, рецидив гиперинсулинизма исключен. В статье подробно изложены результаты клинических, лучевых методов обследования, подробный анамнез, техника оперативного лечения, проанализирован результат вмешательства. В данной статье, в рамках дискуссии, проведен анализ литературных данных о проведении лапароскопических резекций поджелудочной железы у детей с врожденным гиперинсулинизмом.

Ключевые слова: гипогликемия; гиперинсулинизм; лапароскопическая панкреатэктомия; дети; позитронно-эмиссионная и компьютерная томография; ¹⁸F-ДОФА; экспресс-биопсия.

Как цитировать:

Сухоцкая А.А., Каганцов И.М., Баиров В.Г., Витовщик М.Г., Никитина И.Л., Рыжкова Д.В., Митрофанова Л.Б., Саракаева Л.Р. Клинический пример успешной лапароскопической резекции редкой фокальной формы врожденного гиперинсулинизма с обзором литературы // Российский вестник детской хирургии, анестезиологии и реаниматологии. 2023. Т. 13, № 2. С. 225–235. DOI: <https://doi.org/10.17816/psaic1501>

DOI: <https://doi.org/10.17816/psaic1501>

Research Article

Successful laparoscopic resection of a rare focal form of congenital hyperinsulinism: Case report and literature review

Anna A. Sukhotskaya, Ilya M. Kagantsov, Vladimir G. Bairov, Mikhail G. Vitovshchik, Irina L. Nikitina, Daria V. Ryzhkova, Lubov B. Mitrofanova, Leila R. Sarakaeva

Almazov National Medical Research Center, Saint Petersburg, Russia

Abstract

Congenital hyperinsulinism is a severe disease that causes irreversible damage to the cerebral cortex. This article presents a clinical observation of successful surgical treatment for a child with an extremely rare form of hyperinsulinism accompanied by two foci in the opposite ends of the pancreas. The child was in extremely critical condition from birth due to recurrent hypoglycemia and was diagnosed with hyperinsulinism at the age of two weeks. Specific therapy with diazoxide and octreotide was initiated but proven to be ineffective (parenteral glucose administration was still needed, and octreotide only provided partial results). When the child was one month old, positron emission tomography-computed tomography with 18F-DOPA was performed and revealed the focal hyperfixation of the radiopharmaceutical in the tail and head of the pancreas. This finding indicated the presence of two pathological foci or a focus in the tail and the physiological accumulation of the radiopharmaceutical in the head. At the age of one month and 20 days, the child underwent laparoscopic revision of the pancreas to visualize a focus in the tail that was confirmed by express biopsy. The resection of the tail (15%) was performed with confirmation of clear resection margins. During further revision, a focus was detected in the head. Resection was again performed with histological confirmation of complete resection. On the 12th day after the operation, the child was discharged without therapy with clinical recovery. The child is currently being monitored (for over six months), growing and developing according to age. A fasting test was performed, and the recurrence of hyperinsulinism was ruled out. This article presents a detailed description of the clinical and radiological examination results, the patient's history, the surgical techniques, and the intervention results. As part of the discussion, a literature review on the behavior of laparoscopic resections of the pancreas in children with congenital hyperinsulinism was carried out.

Keywords: hypoglycemia; hyperinsulinism; laparoscopic pancreatectomy; children; positron emission and computed tomography; 18F-DOPA; express biopsy.

To cite this article:

Sukhotskaya AA, Kagantsov IM, Bairov VG, Vitovshchik MG, Nikitina IL, Ryzhkova DV, Mitrofanova LB, Sarakaeva LR. Successful laparoscopic resection of a rare focal form of congenital hyperinsulinism: Case report and literature review. *Russian Journal of Pediatric Surgery, Anesthesia and Intensive Care*. 2023;13(2):225–235. DOI: <https://doi.org/10.17816/psaic1501>

Received: 04.02.2023

Accepted: 17.05.2023

Published: 28.06.2023

DOI: <https://doi.org/10.17816/psaic1501>

腹腔镜下成功切除罕见的局灶性先天性高胰岛素血症的临床病例及文献综述

Anna A. Sukhotskaya, Ilya M. Kagantsov, Vladimir G. Bairov, Mikhail G. Vitovshchik,
Irina L. Nikitina, Daria V. Ryzhkova, Lubov B. Mitrofanova, Leila R. Sarakaeva

Almazov National Medical Research Center, Saint Petersburg, Russia

简评

先天性高胰岛素血症是一种严重的疾病，它导致大脑皮层的不可逆性损伤。本文介绍了对一名患有极为罕见的高胰岛素血症的儿童成功进行手术治疗的临床观察。该患儿在胰腺两端里有两个病灶。自出生以来，由于反复出现低血糖，该患儿的情况一直很危重。该患儿在2周大的时候被诊断为高胰岛素血症。开始了使用二氮嗪和奥曲肽进行特殊治疗。但事实证明，这种治疗是无效的。把葡萄糖注射到静脉中的需求仍然很高。药物奥曲肽只产生了部分效果。在孩子1个月大的时候，对患儿进行了正电子发射计算机断层扫描结合18F-DOPA计算机断层扫描。在胰腺的尾部和头部发现了放射性药物的局灶性超固定。这可能表明，存在两个病理病灶或尾部有一个病灶，头部有放射性药物的生理性积累。在孩子1个月零20天大的时候，患儿被带到了手术室。当对胰腺进行腹腔镜检查时，发现了尾部有一个病灶。快速活检的数据证实了该病灶。进行了尾部切除术（15%），并确认了切除边缘干净。进一步检查发现了头部有一个病灶。它被切除了。通过组织学检查确认了切除的完整性。患儿出院时没有接受任何治疗，术后第12天就实现了临床康复。对该孩子正在进行随访工作（超过6个月）。患儿随着年龄增长和发育。已经进行了禁食试验。排除了高胰岛素血症的复发。文章中详细描述了临床和放射学检查方法的结果、详细的病史及手术治疗技术。对手术的结果进行了分析。在本文中在讨论的框架内分析了关于对患有先天性高胰岛素血症的儿童进行腹腔镜胰腺切除术的文献数据。

关键词：低血糖；高胰岛素血症；腹腔镜胰体切除术；儿童；正电子发射计算机断层扫描和电子计算机断层扫描；18F-DOPA；快速活检。

引用本文：

Sukhotskaya AA, Kagantsov IM, Bairov VG, Vitovshchik MG, Nikitina IL, Ryzhkova DV, Mitrofanova LB, Sarakaeva LR. 腹腔镜下成功切除罕见的局灶性先天性高胰岛素血症的临床病例及文献综述. *Russian Journal of Pediatric Surgery, Anesthesia and Intensive Care*. 2023;13(2):225–235. DOI: <https://doi.org/10.17816/psaic1501>

收到：04.02.2023

接受：17.05.2023

发布日期：28.06.2023

ВВЕДЕНИЕ

Врожденный гиперинсулинизм (ВГИ) характеризуется стойкой гиперинсулинемической гипогликемией вследствие различных генетических нарушений. Первое описание ВГИ принадлежит I. McQuarrie, опубликованное в 1954 г. [1]. В патогенезе всех моногенных форм ВГИ рецидивирующая гипогликемия является следствием неадекватной гиперсекреции инсулина β -клетками поджелудочной железы в ответ на изменение уровня сахара в крови.

Бурное развитие малоинвазивных методик в последние 30 лет привело к развитию лапароскопической хирургии поджелудочной железы, однако сообщения о частичных или субтотальных панкреатэктомиях у детей лапароскопическим доступом единичны [2–5].

В отделении детской хирургии пороков развития Перинатального центра Федерального государственного бюджетного учреждения «Национальный медицинский исследовательский центр им. В.А. Алмазова» (ФГБУ «НМИЦ им. В.А. Алмазова») за период с 2017 г. по июнь 2022 г. оперировано 57 из 93 детей с врожденным гиперинсулинизмом, находящихся на обследовании и лечении в эндокринологическом отделении. Всем оперированным детям первоначально была выполнена позитронно-эмиссионная и компьютерная томография (ПЭТ/КТ) с ^{18}F -ДОФА. По данным ПЭТ/КТ у 57 детей диагностированы 13 диффузных форм и 37 фокальных. Еще у 7 детей получены неоднозначные данные ПЭТ/КТ и предполагался атипичный вариант поражения железы. У большинства оперированных детей начало заболевания отмечено в первые сутки после рождения, что свидетельствует о более тяжелых формах заболевания. По гендерному признаку преобладали девочки (1,9 : 1), эти различия наиболее выражены среди детей с диффузными формами ВГИ (5 : 1). Возраст на момент операции составил от 23 дней до 58 мес. [6].

При диффузной форме заболевания выполнялась «почти тотальная» панкреатэктомия в объеме 98–99 %, которая привела к купированию гиперинсулинизма у 85 % детей (11 из 13). Только у двух пациентов после операции сохраняется ВГИ, но в послеоперационном периоде удалось добиться стойкой эугликемии постоянной подкожной инфузией октреотида с помощью помпы, без парентерального введения растворов глюкозы. У 9 (69 %) из 13 детей с диффузной формой развился сахарный диабет. Среди 37 пациентов с фокальной формой ВГИ гиперинсулинизм купирован у 36 (97 %), а у одного в послеоперационном периоде удалось добиться стойкой эугликемии с помощью помпы с октреотидом, без необходимости дополнительной дотации глюкозы парентеральным путем. Во время оперативного вмешательства выполнялась экспресс-биопсия с целью подтверждения диффузного, фокального или атипичного поражения железы, а также «чистоты» краев резекции (отсутствие патологической ткани) при фокальном поражении [7].

Большинство оперативных вмешательств выполнялось путем верхней поперечной лапаротомии (93 %). У 4 пациентов оперативное вмешательство проходило лапароскопическим доступом.

В данной работе мы хотим поделиться редким наблюдением мультифокального поражения поджелудочной железы с расположением отдельных очагов в разных концах железы (головке и хвосте) выздоровевшей пациентки после хирургической коррекции лапароскопическим доступом.

ОПИСАНИЕ НАБЛЮДЕНИЯ

Девочка, родилась в Московской области, от второй беременности, вторых срочных родов, с массой тела 4200 г, длиной 55 см, по шкале Апгар 8/9 баллов. На 2-е сутки жизни, в связи с развившимися судорогами, ребенок был переведен в отделение анестезиологии, реанимации и интенсивной терапии, где зафиксирована гипогликемия до 1 ммоль/л, без повышения лактата, без кетонурии, со значительным повышением уровня аммония. Несмотря на непрерывную инфузию глюкозы [до 16 мг/(кг · мин)], отмечалась стойкая тенденция к гипогликемии. С третьих суток жизни ребенка начата терапия дексаметазоном; на этом фоне удалось кратковременно стабилизировать уровень сахара. С седьмых суток жизни начата терапия октреотидом с положительным эффектом. В возрасте 2 нед. ребенок был переведен в отделение патологии новорожденных больницы Москвы. Учитывая повышение уровня инсулина до 37 мкМЕ/мл (инсулин 260 пмоль/л, кортизол 13,7 нмоль/л) на фоне ацетотической гипогликемии (2,1 ммоль/л) ребенку выставлен диагноз: «Врожденный гиперинсулинизм». Согласно клиническим рекомендациям была начата терапия диазоксидом (в комбинации с гипотиазидом) на фоне непрерывной парентеральной дотации глюкозы. Во время лечения был отмечен кратковременный эффект в виде нормогликемии (в течение 7 сут). В возрасте 1 мес. 7 дней ребенок был переведен в ФГБУ НМИЦ им. В.А. Алмазова. На момент поступления углеводная нагрузка составляла 18,5 г/(кг · сут). Нормогликемия поддерживалась в диапазоне 3,8–5,0 ммоль/л. Проведено ПЭТ/КТ с ^{18}F -ДОФА. На серии ПЭТ/КТ-томограмм органов брюшной полости отмечалась фокальная гиперфиксация ^{18}F -ДОФА в хвосте поджелудочной железы [панкреатический индекс на 10-минутном скане, выполненном через 50 мин после инъекции радиофармпрепарата (РФП) по отношению к телу железы — 1,56], также отмечался высокий фокальный захват РФП в головке поджелудочной железы (панкреатический индекс на 10-минутном скане, выполненном через 50 мин после инъекции РФП по отношению к телу железы — 2,04). По данным заключения картина ПЭТ/КТ может соответствовать мультифокальной форме врожденного гиперинсулинизма с локализацией аденоматозного фокуса в хвосте и головке поджелудочной железы. В то же время

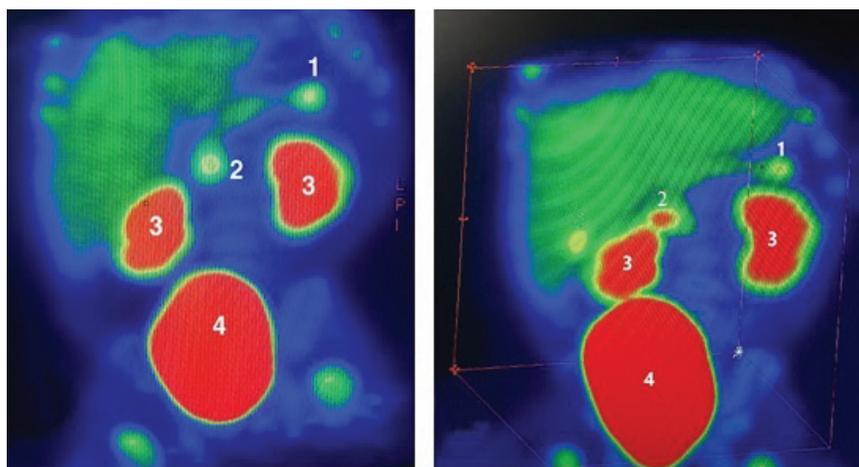


Рис. 1. Картина позитронно-эмиссионной и компьютерной томографии с 18F-ДОФА у пациентки. 1 — очаг в хвосте поджелудочной железы; 2 — очаг в головке поджелудочной железы; 3 — накопление радиофармпрепарата в почках; 4 — накопление радиофармпрепарата в мочевом пузыре

Fig. 1. Combined positron emission tomography and computed tomography with 18F-DOPA for the patient. 1 — a focus in the tail of the pancreas, 2 — a focus in the head of the pancreas, 3 — accumulation of radiopharmaceutical in the kidneys, and 4 — accumulation of radiopharmaceutical in the bladder

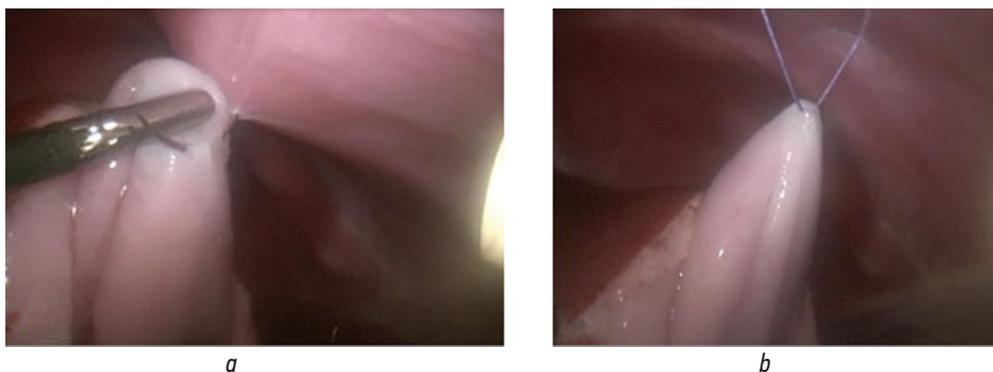


Рис. 2. Фиксация желудка к передней брюшной стенке тракционными швами: *a* — фиксация большой кривизны желудка к передней брюшной стенке; *b* — тракционный шов завершен

Fig. 2. Fixation of the stomach to the anterior abdominal wall with traction sutures: *a* — process of fixing the large curvature of the stomach to the anterior abdominal wall and *b* — traction seam is completed

фокальная гиперфиксация 18F-ДОФА в головке поджелудочной железы может иметь физиологическую природу. Рекомендована верификация путем морфологического исследования результатов интраоперационной биопсии (рис. 1).

В возрасте 1 мес. 20 дней ребенку выполнена операция: лапароскопическая резекция хвоста поджелудочной железы (15 %) и резекция очага головки поджелудочной железы. Техника операции: разрез под пупком, с помощью иглы Вереша создали карбоксиперитонеум (давление 9–11 мм рт. ст. с потоком 2 л/мин), установлен 5-мм троакар с 30° оптикой. Слева и справа от пупка по срединно-ключичной линии установили 3- и 5-мм рабочие троакары. Для доступа в полость малого сальника вскрывали желудочно-ободочную связку с использованием биполярной коагуляции аппаратом Ligasure. Мобилизованный желудок по большой кривизне фиксировали к передней брюшной стенке временными тракционными швами (рис. 2).

При осмотре поджелудочной железы визуализирован очаг плотной ткани в хвосте размерами 1 × 1,5 см (рис. 3).

С помощью монополярной коагуляции отделили хвост и тело железы от селезеночных сосудов на 1,0 см

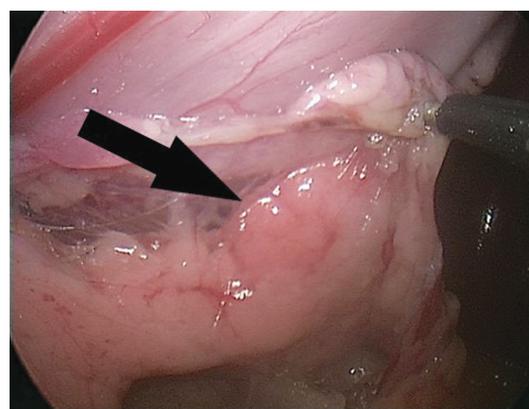


Рис. 3. Очаг патологической ткани в хвосте поджелудочной железы
Fig. 3. Focus of pathological tissues in the tail of the pancreas

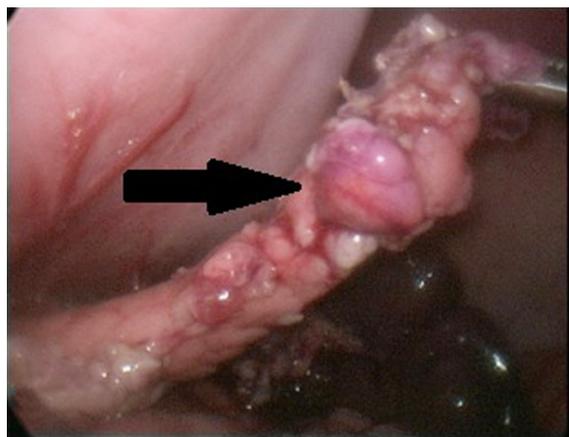
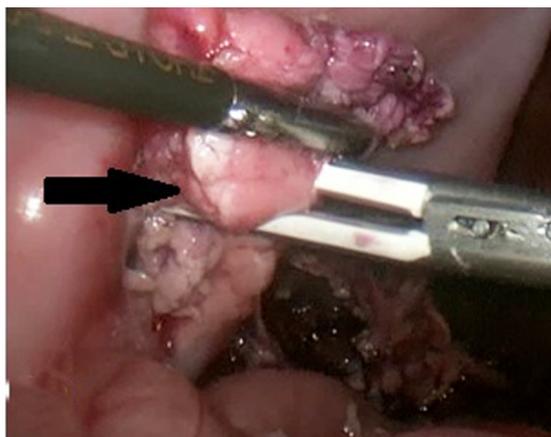
*a**b*

Рис. 4. Мобилизация и резекция хвоста поджелудочной железы
Fig. 4. Mobilization and resection of the tail of the pancreas

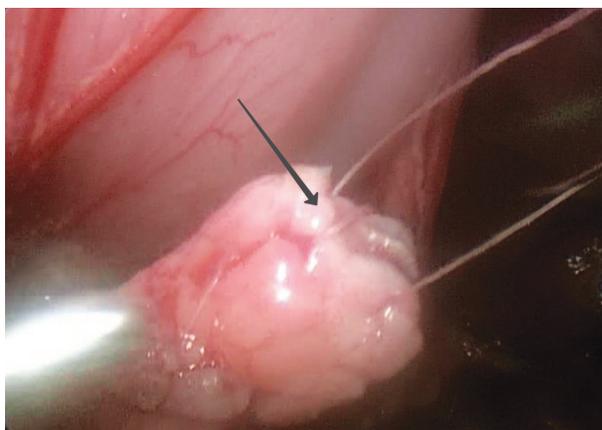


Рис. 5. Герметизация культи хвоста поджелудочной железы
Fig. 5. Sealing of the stump of the tail of the pancreas

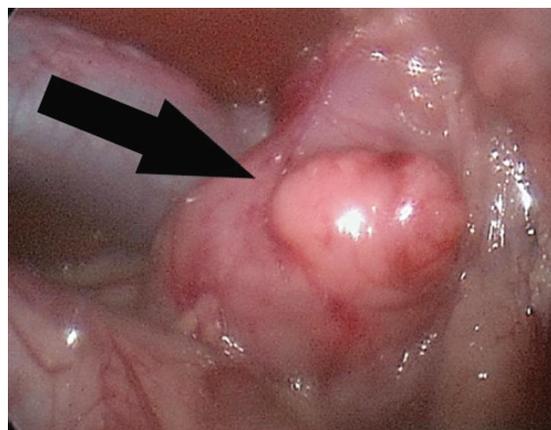


Рис. 6. Очаг в головке поджелудочной железы
Fig. 6. Focus in the head of the pancreas

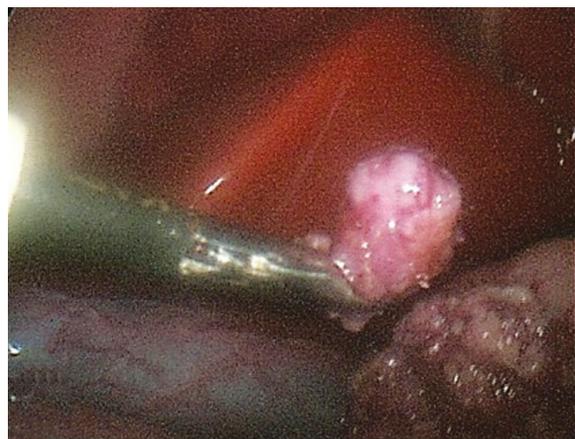
*a**b*

Рис. 7. Резекция очага гиперинсулинизма из головки поджелудочной железы: *a* — резекция очага патологической ткани; *b* — участок головки поджелудочной железы после резекции (стрелка указывает на ложе очага)
Fig. 7. Resection of the focus of hyperinsulinism from the head of the pancreas: *a* — resection of the focus of pathological tissues and *b* — area of the head of the pancreas after resection (the bed of the focus)

проксимальнее визуально определенной зоны поражения и пересекли железу с помощью аппарата Ligasure (рис. 4).

Резецированный участок был удален из брюшной полости через 5-мм троакар и отправлен на срочное гистологическое исследование.

По данным экспресс-биопсии подтвержден очаг гиперинсулинизма, а в краях резекции — отсутствие патологической ткани. Культю железы герметизировали обвивным швом нитью Vicril 5/0 (рис. 5).

При дальнейшем визуальном осмотре был выявлен округлый участок плотной ткани размерами $0,5 \times 0,7$ см в головке поджелудочной железы (рис. 6).

Учитывая «отграниченность» очага от основной ткани, путем монополярной коагуляции выполнена резекция очага патологической ткани (рис. 7) из головки поджелудочной железы также с проведением экспресс-биопсии, подтвердившей отсутствие патологической ткани в краях резекции.

Желудочно-ободочную связку не восстанавливали. Дренажные трубки не использовали. После удаления троакаров ушивали раны передней брюшной стенки. По данным гистологического исследования залитых препаратов было подтверждено наличие двух очагов гиперинсулинизма с «чистыми» границами резекций.

Ранний послеоперационный период протекал без хирургических осложнений. Девочка экстубирована через 5 ч после операции, в дальнейшем без респираторной поддержки. Амилаза в первые послеоперационные сутки 6 ЕД/мл. Проводилась продленная перидуральная анестезия в течение 3 сут. Энтеральная нагрузка начата с первых послеоперационных суток, с расширением до полного объема к шестым. В течение первых 5 сут после операции получала октреотид с панкреатопротекторной целью: максимальная доза на первые сутки 5 мкг/(кг · сут) с постепенным уменьшением вплоть до полной отмены на пятые. Уровень гликемии после отмены октреотида оставался стабильным в диапазоне 4,2–6,7 ммоль/л. С восьмых суток после операции отменена парентеральная дотация глюкозы, уровень гликемии оставался в целевых значениях (5,2–7,4 ммоль/л). Проведена проба с голоданием — рецидив гиперинсулинизма исключен. На 12-й день после операции ребенок выписан в удовлетворительном состоянии по месту жительства. Через 2 нед. после выписки получены результаты генетического исследования, проведенного в ФГБУ НМИЦ эндокринологии Минздрава России методом массового параллельного секвенирования на панели «Сахарный диабет-гиперинсулинизм». В гене *ABCC8* (NM 000352.6) в регионе донорного сайта сплайсинга экзона 8 обнаружен вариант нуклеотидной последовательности (HG38, chr11:1744851C>A, c.1332G>T), описанный как патогенный. В настоящий момент ребенок

находится под амбулаторным наблюдением эндокринолога по месту жительства, срок наблюдения более 6 мес. Растет и развивается по возрасту, эпизодов гипогликемии не наблюдается (минимальный уровень глюкозы крови натощак 4,2 ммоль/л). Ребенку проводилась проба с голоданием, рецидив гиперинсулинизма исключен.

ОБСУЖДЕНИЕ

У новорожденных и детей раннего возраста в последнее десятилетие лапароскопическая хирургия используется при многих оперативных вмешательствах с целью коррекции врожденных пороков развития. Основные значимые преимущества минимально инвазивных операций: предотвращение больших хирургических доступов (с целью минимизирования повреждающего воздействия), соответственно меньший болевой синдром в послеоперационном периоде, более ранняя активизация ребенка и начало энтерального кормления и, безусловно, косметический результат. Следствием всего вышеперечисленного является более ранняя выписка [8].

К концу XX в. хирурги по всему миру начали применять лапаро- и торакоскопическую хирургию у взрослых и детей, но первые сообщения о лапароскопических резекциях поджелудочной железы у взрослых пациентов стали появляться только в 90-х годах [9–17], что обусловлено топографическими и структурными особенностями органа: железа находится глубоко в забрюшинном пространстве, плотно прикреплена к двенадцатиперстной кишке, интимно связана с крупными мезентериальными и селезеночными сосудами и прикрывается внутренними органами. Кроме того, ее мягкая железистая консистенция и способность фиброзировать окружающие ткани в условиях патологии делают ее опасным кандидатом для лапароскопии [18].

M.L. Blakely с соавторами в 2001 г. впервые сообщил о выполнении лапароскопической резекции 75 % поджелудочной железы у ребенка с ВГИ. По их данным, при повторном вмешательстве вследствие рецидива тяжелых гипогликемий была выполнена лапаротомия, при которой не обнаружено спаек, что позволило провести «почти тотальную» панкреатэктомию без затруднений [19]. В последующем стали появляться сообщения о лапароскопической панкреатэктомии у детей с ВГИ [2, 3, 20, 21]. Авторы также отмечают отсутствие спаечного процесса и возможность при необходимости повторной лапароскопической резекции. В нашей стране первым опытом лапароскопических панкреатэктомий при ВГИ поделились Ю.Ю. Соколов и соавт. в 2020 г. [5].

Лапароскопическую панкреатэктомию при ВГИ большинство авторов считают целесообразной только при дистальной (корпокаудальной) резекции [20–22]. Основной недостаток лапароскопического доступа состоит в низкой тактильной обратной связи, затрудняющей

верификацию мелких аденоматозных поражений, а возможность проведения ультразвукового исследования поджелудочной железы интраоперационно при лапароскопическом доступе ограничена [23], что могло бы не только облегчить поиск очагового поражения, но и идентифицировать проток железы, а также оценить отдаленность расположения от него очага [24]. Кроме того, при очаговом поражении в области тела и хвоста во время открытой операции чаще была бы выполнена экономная резекция очага, а не дистальная резекция железы, что позволяет осуществить более органосохраняющее вмешательство [25].

Несмотря на то что ряд сообщений подтверждает возможность лапароскопической субтотальной панкреатэктомии при ВГИ [2–4, 21, 26, 27], другие авторы отмечают клиническую недостаточность выполненной панкреатэктомии, необходимость повторных более полных резекций [23, 26]. На это указывают и N.S. Adzick и P. Laje [25], работающие в клинике в Филадельфии, США, где имеется наибольший опыт панкреатэктомий в мире — 527 за 21 год. Так, им пришлось оперировать повторно 5 детей после лапароскопических «почти тотальных» резекций в связи с рецидивом ВГИ, и ни в одном случае на повторной операции предыдущая резекция не была близка к требуемой по объему. Авторы считают, что это связано с нежеланием хирургов кропотливо обнажать внутрипанкреатическую часть холедоха во избежание возможных его повреждений [25]. В то же время, все авторы отмечают благоприятные условия для выполнения повторной операции после лапароскопического вмешательства ввиду практически отсутствия спаечного процесса.

Оценивая ретроспективно наших пациентов с фокальной формой, из 36 пациентов (не считая представленного выше пациента с очень редкой мультифокальной формой) очаги поражения находились в хвосте и теле поджелудочной железы у 12 детей. Это позволяет нам считать, что у 33 % детей с фокальной формой резекция железы может быть безопасно осуществлена с помощью лапароскопии.

ЗАКЛЮЧЕНИЕ

Наш начальный опыт использования лапароскопического доступа у 4 пациентов с расположением патологических очагов в теле и/или хвосте железы показал возможность его эффективного применения при ВГИ. Результаты лапароскопии сопоставимы с открытыми операциями на поджелудочной железе как в достижении купирования гиперинсулинизма при фокальных формах, так и в дифференцированном подходе к объему удаления железы (резекция очага или дистальная резекция). Тщательный селективный подход к подбору пациентов для выполнения оперативного вмешательства лапароскопическим доступом позволил провести операцию у ребенка с крайне редкой мультифокальной

формой заболевания с расположением очагов в разных концах железы (головке и хвосте), приведенном в представленном клиническом примере. В дальнейшем, такой метод позволит нам расширить границы применения малоинвазивной хирургии при лечении ВГИ, не уменьшая при этом эффективности удаления необходимого объема поджелудочной железы.

ДОПОЛНИТЕЛЬНАЯ ИНФОРМАЦИЯ

Вклад авторов. Все авторы внесли существенный вклад в разработку концепции, проведение исследования и подготовку статьи, прочли и одобрили финальную версию перед публикацией. А.А. Сухоцкая — хирургическое лечение пациента, обзор литературы, сбор и анализ литературных источников, написание текста и редактирование статьи; И.М. Каганцов, В.Г. Баиров — обзор литературы, анализ литературных источников, редактирование статьи; М.Г. Витовщик — курация, хирургическое лечение пациента, сбор и анализ литературных источников, написание текста и подготовка рисунков статьи; И.Л. Никитина — обзор литературы, сбор и анализ литературных источников, редактирование статьи; Д.В. Рыжкова, Л.Б. Митрофанова, Л.Р. Саракаева — обзор литературы, сбор и анализ литературных источников, написание текста и редактирование статьи.

Источник финансирования. Авторы заявляют об отсутствии внешнего финансирования при проведении поисково-аналитической работы и подготовке рукописи.

Конфликт интересов. Авторы декларируют отсутствие явных и потенциальных конфликтов интересов, связанных с публикацией настоящей статьи.

Информированное согласие на публикацию. Авторы получили письменное согласие законных представителей пациента на публикацию медицинских данных и фотографий.

ADDITIONAL INFORMATION

Authors' contribution. All authors made a substantial contribution to the conception of the work, acquisition, analysis, interpretation of data for the work, drafting and revising the work, final approval of the version to be published and agree to be accountable for all aspects of the work. A.A. Sukhotskaya, I.M. Kagantsov, V.G. Bairov, M.G. Vitovshchik, I.L. Nikitina, D.V. Ryzhkova, L.B. Mitrofanova, L.R. Sarakaeva — analyzed data; A.A. Sukhotskaya, I.M. Kagantsov, V.G. Bairov, M.G. Vitovshchik — wrote the manuscript with input from all authors.

Funding source. This publication was not supported by any external sources of funding.

Competing interests. The authors declare that they have no competing interests.

Informed consent for publication. The authors have obtained written consent from the patient's legal representatives for the publication of medical data and photographs.

СПИСОК ЛИТЕРАТУРЫ

1. McQuarrie I. Idiopathic spontaneously occurring hypoglycemia in infants; clinical significance of problem and treatment // *AMA Am J Dis Child*. 1954. Vol. 87, No. 4. P. 399–428. DOI: 10.1001/archpedi.1954.02050090387001
2. Bax K.N.M.A., van der Zee D.C. The laparoscopic approach toward hyperinsulinism in children // *Semin Pediatr Surg*. 2007. Vol. 16, No. 4. P. 245–251. DOI: 10.1053/j.sempedsurg.2007.06.006
3. Al-Shanafey S. Laparoscopic vs open pancreatectomy for persistent hyperinsulinemic hypoglycemia of infancy // *J Pediatr Surg*. 2009. Vol. 44, No. 5. P. 957–961. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2009.01.042
4. Zhang J.-S., Li L., Cheng W. Single incision laparoscopic 90% pancreatectomy for the treatment of persistent hyperinsulinemic hypoglycemia of infancy // *Pediatr Surg Int*. 2016. Vol. 32, No. 10. P. 1003–1007. DOI: 10.1007/s00383-016-3943-9
5. Соколов Ю.Ю., Меликян М.А., Ефременков А.М., и др. Лапароскопические резекции поджелудочной железы у детей с гиперинсулинизмом // *Детская хирургия*. 2020. Т. 24, № 6. С. 363–369. DOI: 10.18821/1560-9510-2020-24-6-363-369
6. Сухоцкая А.А., Баиров В.Г., Перминова А.А., и др. Зависимость объема резекции поджелудочной железы при врожденном гиперинсулинизме от данных ПЭТ-томографии и экспресс-биопсии // *Детская хирургия. Журнал им. Ю.Ф. Исакова*. 2021. Т. 25, № 1. С. 11–18. DOI: 10.18821/1560-9510-2021-25-1-11-18
7. Сухоцкая А.А., Баиров В.Г., Митрофанова Л.Б., и др. Врожденный гиперинсулинизм: значение визуальной оценки позитронно-эмиссионной томографии и роль хирурга в определении границ резекции поджелудочной железы // *Российский вестник детской хирургии, анестезиологии и реаниматологии*. 2022. Т. 12, № 1. С. 19–30. DOI: 10.17816/psaic1221
8. Jaffray B. Minimally invasive surgery // *Arch Dis Child*. 2005. Vol. 90, No. 5. P. 537–542. DOI: 10.1136/adc.2004.062760
9. Gagner M., Pomp A. Laparoscopic pylorus-preserving pancreatoduodenectomy // *Surg Endosc*. 1994. Vol. 8, No. 5. P. 408–410. DOI: 10.1007/BF00642443
10. Cuschieri A., Jakimowicz J.J., van Spreeuwel J. Laparoscopic distal 70% pancreatectomy and splenectomy for chronic pancreatitis // *Ann Surg*. 1996. Vol. 223, No. 3. P. 280–285. DOI: 10.1097/0000658-199603000-00008
11. Sussman L.A., Christie R., Whittle D.E. Laparoscopic excision of distal pancreas including insulinoma // *Aust N Z J Surg*. 1996. Vol. 66, No. 6. P. 414–416. DOI: 10.1111/j.1445-2197.1996.tb01222.x
12. Gagner M. Laparoscopic treatment of acute necrotizing pancreatitis // *Semin Laparosc Surg*. 1996. Vol. 3, No. 1. P. 21–28. DOI: 10.1053/SLAS00300021
13. Tihanyi T.F., Morvay K., Nehéz L., et al. Laparoscopic distal resection of the pancreas with the preservation of the spleen // *Acta Chir Hung*. 1997. Vol. 36, No. 1–4. P. 359–361.
14. Vezakis A., Davides D., Larvin M., McMahon M.J. Laparoscopic surgery combined with preservation of the spleen for distal pancreatic tumors // *Surg Endosc*. 1999. Vol. 13, No. 1. P. 26–29. DOI: 10.1007/s004649900891.
15. Matsumoto T., Kitano S., Yoshida T., et al. Laparoscopic resection of a pancreatic mucinous cystadenoma using laparoscopic coagulating shears // *Surg Endosc*. 1999. Vol. 13, No. 2. P. 172–173. DOI: 10.1007/s004649900933
16. Park A., Schwartz R., Tandan V., Anvari M. Laparoscopic pancreatic surgery // *Am J Surg*. 1999. Vol. 177, No. 2. P. 158–163. DOI: 10.1016/s0002-9610(98)00325-0
17. Cuschieri S.A., Jakimowicz J.J., Stultiens G. Laparoscopic infracolic approach for complications of acute pancreatitis // *Semin Laparosc Surg*. 1998. Vol. 5, No. 3. P. 189–194. DOI: 10.1177/155335069800500306
18. Cawich S.O., Kluger M.D., Francis W., et al. Review of minimally invasive pancreas surgery and opinion on its incorporation into low volume and resource poor centres // *World J Gastrointest Surg*. 2021. Vol. 13, No. 10. P. 1122–1135. DOI: 10.4240/wjgs.v13.i10.1122
19. Blakely M.L., Lobe T.E., Cohen J., Burghen G.A. Laparoscopic pancreatectomy for persistent hyperinsulinemic hypoglycemia of infancy // *Surg Endosc*. 2001. Vol. 15, No. 8. P. 897–898. DOI: 10.1007/s004640040031
20. Al-Shanafey S., Habib Z., AlNassar S. Laparoscopic pancreatectomy for persistent hyperinsulinemic hypoglycemia of infancy // *J Pediatr Surg*. 2009. Vol. 44, No. 1. P. 134–138; discussion 138. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2008.10.120
21. Pierro A., Nah S.A. Surgical management of congenital hyperinsulinism of infancy // *Semin Pediatr Surg*. 2011. Vol. 20, No. 1. P. 50–53. DOI: 10.1053/j.sempedsurg.2010.10.009
22. Soheilipour F., Jesmi F., Ahmadi M., et al. Minimally invasive surgical interventions in the treatment of primary persistent hyperinsulinemic hypoglycemia of infancy // *Arch Endocrinol Metab*. 2015. Vol. 59, No. 5. P. 466–469. DOI: 10.1590/2359-3997000000094
23. Adzick N.S., De Leon D.D., States L.J., et al. Surgical treatment of congenital hyperinsulinism: Results from 500 pancreatectomies in neonates and children // *J Pediatr Surg*. 2019. Vol. 54, No. 1. P. 27–32. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2018.10.030
24. Bjarnesen A.P., Dahlin P., Globa E., et al. Intraoperative ultrasound imaging in the surgical treatment of congenital hyperinsulinism: prospective, blinded study // *BJS Open*. 2021. Vol. 5, No. 2. ID zraa008. DOI: 10.1093/bjsopen/zraa008
25. Adzick N., Laje P. Pancreatectomy for hyperinsulinism. *Operative Pediatric Surgery*. 8th edition / Ed. by M. Davenport, J. Geiger. CRC Press, 2020. P. 589–596. DOI: 10.1201/9781351250801-64.
26. Liem N.T., Son T.N., Hoan N.T. Laparoscopic near-total pancreatectomy for persistent hyperinsulinemic hypoglycemia of infancy: report of two cases // *J Laparoendosc Adv Surg Tech A*. 2010. Vol. 20, No. 1. P. 115–117. DOI: 10.1089/lap.2008.0316
27. Richards M.K., Clifton M.S. Minimally invasive surgery of the pancreas: a narrative review of current practice // *Transl Gastroenterol Hepatol*. 2021. Vol. 6. ID 38. DOI: 10.21037/tgh-20-220

REFERENCES

1. McQuarrie I. Idiopathic spontaneously occurring hypoglycemia in infants; clinical significance of problem and treatment. *AMA Am J Dis Child.* 1954;87(4):399–428. DOI: 10.1001/archpedi.1954.02050090387001
2. Bax KNMA, van der Zee DC. The laparoscopic approach toward hyperinsulinism in children. *Semin Pediatr Surg.* 2007;16(4):245–251. DOI: 10.1053/j.sempedsurg.2007.06.006
3. Al-Shanafey S. Laparoscopic vs open pancreatectomy for persistent hyperinsulinemic hypoglycemia of infancy. *J Pediatr Surg.* 2009;44(5):957–961. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2009.01.042
4. Zhang J-S, Li L, Cheng W. Single incision laparoscopic 90% pancreatectomy for the treatment of persistent hyperinsulinemic hypoglycemia of infancy. *Pediatr Surg Int.* 2016;32(10):1003–1007. DOI: 10.1007/s00383-016-3943-9
5. Sokolov YuYu, Melikyan MA, Efremenkov AM, et al. Laparoscopic resections of the pancreas in children with hyperinsulinism. *Russian Journal of Pediatric Surgery.* 2020;24(6):363–369. (In Russ.) DOI: 10.18821/1560-9510-2020-24-6-363-369
6. Sukhotskaya AA, Bairov VG, Perminova AA, et al. Dependence of pancreas resection volume on PET-tomography and express biopsy findings. *Russian Journal of Pediatric Surgery.* 2021;25(1):11–18. (In Russ.) DOI: 10.18821/1560-9510-2021-25-1-11-18
7. Sukhotskaya AA, Bairov VG, Mitrofanova LB, et al. Congenital hyperinsulinism: the significance of visual evaluation of positron emission tomography and the role of the surgeon in determining the limits of pancreatic resection. *Russian Journal of Pediatric Surgery, Anesthesia and Intensive Care.* 2022;12(1):19–30. (In Russ.) DOI: 10.17816/psaic1221
8. Jaffray B. Minimally invasive surgery. *Arch Dis Child.* 2005;90(5):537–542. DOI: 10.1136/adc.2004.062760
9. Gagner M, Pomp A. Laparoscopic pylorus-preserving pancreatoduodenectomy. *Surg Endosc.* 1994;8(5):408–410. DOI: 10.1007/BF00642443
10. Cuschieri A, Jakimowicz JJ, van Spreeuwel J. Laparoscopic distal 70% pancreatectomy and splenectomy for chronic pancreatitis. *Ann Surg.* 1996;223(3):280–285. DOI: 10.1097/0000658-199603000-00008
11. Sussman LA, Christie R, Whittle DE. Laparoscopic excision of distal pancreas including insulinoma. *Aust NZ J Surg.* 1996;66(6):414–416. DOI: 10.1111/j.1445-2197.1996.tb01222.x
12. Gagner M. Laparoscopic treatment of acute necrotizing pancreatitis. *Semin Laparosc Surg.* 1996;3(1):21–28. DOI: 10.1053/SLAS00300021
13. Tihanyi TF, Morvay K, Nehéz L, et al. Laparoscopic distal resection of the pancreas with the preservation of the spleen. *Acta Chir Hung.* 1997;36(1-4):359–361.
14. Vezakis A, Davides D, Larvin M, McMahon MJ. Laparoscopic surgery combined with preservation of the spleen for distal pancreatic tumors. *Surg Endosc.* 1999;13(1):26–29. DOI: 10.1007/s004649900891.
15. Matsumoto T, Kitano S, Yoshida T, et al. Laparoscopic resection of a pancreatic mucinous cystadenoma using laparoscopic coagulating shears. *Surg Endosc.* 1999;13(2):172–173. DOI: 10.1007/s004649900933
16. Park A, Schwartz R, Tandan V, Anvari M. Laparoscopic pancreatic surgery. *Am J Surg.* 1999;177(2):158–163. DOI: 10.1016/s0002-9610(98)00325-0
17. Cuschieri SA, Jakimowicz JJ, Stultiens G. Laparoscopic infracolic approach for complications of acute pancreatitis. *Semin Laparosc Surg.* 1998;5(3):189–194. DOI: 10.1177/155335069800500306
18. Cawich SO, Kluger MD, Francis W, et al. Review of minimally invasive pancreas surgery and opinion on its incorporation into low volume and resource poor centres. *World J Gastrointest Surg.* 2021;13(10):1122–1135. DOI: 10.4240/wjgs.v13.i10.1122
19. Blakely ML, Lobe TE, Cohen J, Burghen GA. Laparoscopic pancreatectomy for persistent hyperinsulinemic hypoglycemia of infancy. *Surg Endosc.* 2001;15(8):897–898. DOI: 10.1007/s004640040031
20. Al-Shanafey S, Habib Z, AlNassar S. Laparoscopic pancreatectomy for persistent hyperinsulinemic hypoglycemia of infancy. *J Pediatr Surg.* 2009;44(1):134–138; discussion 138. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2008.10.120
21. Pierro A, Nah SA. Surgical management of congenital hyperinsulinism of infancy. *Semin Pediatr Surg.* 2011;20(1):50–53. DOI: 10.1053/j.sempedsurg.2010.10.009
22. Soheilipour F, Jesmi F, Ahmadi M, et al. Minimally invasive surgical interventions in the treatment of primary persistent hyperinsulinemic hypoglycemia of infancy. *Arch Endocrinol Metab.* 2015;59(5):466–469. DOI: 10.1590/2359-39970000000094
23. Adzick NS, De Leon DD, States LJ, et al. Surgical treatment of congenital hyperinsulinism: Results from 500 pancreatectomies in neonates and children. *J Pediatr Surg.* 2019;54(1):27–32. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2018.10.030
24. Bjarnesen AP, Dahlin P, Globa E, et al. Intraoperative ultrasound imaging in the surgical treatment of congenital hyperinsulinism: prospective, blinded study. *BJS Open.* 2021;5(2):zraa008. DOI: 10.1093/bjsopen/zraa008
25. Adzick N, Laje P. Pancreatectomy for hyperinsulinism. Ed. by Davenport M, Geiger J. *Operative Pediatric Surgery.* 8th edition. CRC Press, 2020. P. 589–596. DOI: 10.1201/9781351250801-64.
26. Liem NT, Son TN, Hoan NT. Laparoscopic near-total pancreatectomy for persistent hyperinsulinemic hypoglycemia of infancy: report of two cases. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A.* 2010;20(1):115–117. DOI: 10.1089/lap.2008.0316
27. Richards MK, Clifton MS. Minimally invasive surgery of the pancreas: a narrative review of current practice. *Transl Gastroenterol Hepatol.* 2021;6:38. DOI: 10.21037/tgh-20-220

ОБ АВТОРАХ

***Анна Андреевна Сухоцкая**, канд. мед. наук, доцент;
адрес: Россия, 197341, Санкт-Петербург, ул. Аккуратова, д. 2;
ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-8734-2227>;
eLibrary SPIN: 6863-7436; e-mail: dxirurgia@mail.ru

Илья Маркович Каганцов, д-р мед. наук, доцент;
ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-3957-1615>;
eLibrary SPIN: 7936-8722; e-mail: ilkagan@rambler.ru

Владимир Гиреевич Баиров, д-р мед. наук, профессор;
ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-8446-830X>;
eLibrary SPIN: 6025-8991; e-mail: vbairov@gmail.com

Михаил Григорьевич Витовщик, детский хирург;
ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-7795-8108>;
eLibrary SPIN: 2992-1533; e-mail: mg@vitovshchik.ru

Ирина Леоровна Никитина, д-р мед. наук, профессор;
ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-4013-0785>;
eLibrary SPIN: 7707-4939; e-mail: Nikitina_IL@almazovcentre.ru

Дарья Викторовна Рыжкова, д-р мед. наук;
ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-7086-9153>;
eLibrary SPIN: 7567-6920; e-mail: Ryzhkova_DV@almazovcentre.ru

Любовь Борисовна Митрофанова, д-р мед. наук;
ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-0735-7822>;
eLibrary SPIN: 9552-8248;
e-mail: Mitrofanova_LB@almazovcentre.ru

Лейла Рамазановна Саракаева;
ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-2752-861X>;
eLibrary SPIN: 5536-4623; e-mail: sarale723@gmail.com

AUTHORS' INFO

***Anna A. Sukhotskaya**, MD, Cand. Sci. (Med.), assistant professor; address: 2 Akkuratova st., Saint Petersburg, 197341, Russia; ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-8734-2227>;
eLibrary SPIN: 6863-7436; e-mail: dxirurgia@mail.ru

Ilya M. Kagantsov, MD, Dr. Sci. (Med.), assistant professor;
ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-3957-1615>;
eLibrary SPIN: 7936-8722; e-mail: ilkagan@rambler.ru

Vladimir G. Bairov, MD, Dr. Sci. (Med.), Professor;
ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-8446-830X>;
eLibrary SPIN: 6025-8991; e-mail: vbairov@gmail.com

Mikhail G. Vitovshchik, pediatric surgeon;
ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-7795-8108>;
eLibrary SPIN: 2992-1533; e-mail: mg@vitovshchik.ru

Irina L. Nikitina, MD, Dr. Sci. (Med.), Professor;
ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-4013-0785>;
eLibrary SPIN: 7707-4939; e-mail: Nikitina_IL@almazovcentre.ru

Daria V. Ryzhkova, Dr. Sci. (Med.);
ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-7086-9153>;
eLibrary SPIN: 7567-6920; e-mail: Ryzhkova_DV@almazovcentre.ru

Lubov B. Mitrofanova, Dr. Sci. (Med.);
ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-0735-7822>;
eLibrary SPIN: 9552-8248;
e-mail: Mitrofanova_LB@almazovcentre.ru

Leila R. Sarakaeva;
ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-2752-861X>;
eLibrary SPIN: 5536-4623; e-mail: sarale723@gmail.com

* Автор, ответственный за переписку / Corresponding author